



TITLE:

Wegener肉芽腫症にみた睾丸膿瘍 の1例

AUTHOR(S):

神田, 英憲; 岡, 聖次; 有馬, 正明; 松田, 稔; 古武, 敏彦;
田中, 正信

CITATION:

神田, 英憲 ...[et al]. Wegener肉芽腫症にみた睾丸膿瘍の1例. 泌尿器科紀
要 1978, 24(2): 161-166

ISSUE DATE:

1978-02

URL:

<http://hdl.handle.net/2433/122171>

RIGHT:

Wegener 肉芽腫症にみた睾丸膿瘍の1例

大阪大学医学部泌尿器科学教室（主任：園田孝夫教授）

神	田	英	憲
岡		聖	次
有	馬	正	明
松	田		稔
古	武	敏	彦

大阪大学医学部皮膚科学教室（主任：佐野栄春教授）

田	中	正	信
---	---	---	---

TESTICULAR ABSCESS WITH WEGENER'S
GRANULOMATOSIS: REPORT OF A CASEHidenori KANDA, Seiji OKA, Masaaki ARIMA,
Minoru MATSUDA, and Toshihiko KOTAKE*From the Department of Urology, Osaka University Hospital*
(Director : Prof. Dr. T. Sonoda, M. D.)

Masanobu TANAKA

From the Department of Dermatology, Osaka University Hospital
(Director : Prof. Dr. S. Sano, M. D.)

A case of testicular abscess with Wegener's granulomatosis in a 31-year-old man was presented in this paper. He noticed a painless mass in the left scrotum during the treatment of Wegener's granulomatosis. The mass was markedly hard in consistency, smooth on the surface and there was no adhesion to the scrotum.

The preoperative diagnosis was an intrascrotal malignant tumor, therefore a high orchiectomy was performed. The surgical specimen demonstrated a solid, round tumor, $7 \times 4 \times 4$ cm in size and contained yellowish green fluid whose bacteriological study was negative. On histological examination it was identified as necrotizing angitis of the testis.

Literature was reviewed briefly and some comments were mentioned on pathogenesis.

Wegener 肉芽腫症は、肉芽腫性病変と血管炎病変をあわせもつ原因不明、予後不良の全身性疾患である。とりわけ泌尿器科領域では腎に病変をみることが多く、さらに放置すれば進行性に悪化して腎不全に陥ることが多い¹⁾。本症の死因の約80%は腎不全であると報告されている²⁾。

今回、われわれは、睾丸膿瘍をきたした Wegener 肉芽腫症の1例を経験したので報告するとともに、Wegener 肉芽腫症における睾丸の病変について若干

の考察を試みたい。

症 例

患者：F. H., 男子, 31歳, 運転手。

主訴：左陰嚢内容の無痛性腫張。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：1975年末より鼻閉を訴え、1976年10月中頃には咳嗽、同年11月初めには眼に異物痛をきたし、11

月9日当院眼科を受診し、角膜辺縁性潰瘍の診断のもとに治療を受けたが軽快せず、同年11月15日には四肢に小水疱を生じた。水疱はすぐに大きくなり血疱、壊死、潰瘍の経過をとった。同年12月1日、当院皮膚科を受診し、入院した。

皮膚科入院時検査所見：血沈1時間値85mm, 2時間値115mm. PSP排泄試験35%(15分値)。尿所見：蛋白陽性、糖陰性、沈渣では毎視野に白血球を0~1個、赤血球を7~10個、硝子、顆粒および白血球円柱を認めた。血液所見：赤血球 $369 \times 10^4/\text{mm}^3$ 、白血球、 $10900/\text{mm}^3$ 、血色素10.4g/dl、ヘマトクリット32%。肝機能：GOT 30.18単位、GPT 17.07単位、アルカリフォスファターゼ16.06 K. A. 単位。血液化学：Na 127 mEq/L, K 5.0 mEq/L, Cl 92 mEq/L, BUN 29 mg/dl, クレアチニン 0.9 mg/dl, 総蛋白 5.82 g/dl, この分画はアルブミン 34.1%, α_1 グロブリン 9.2%, α_2

グロブリン 9.7%, β グロブリン 8.2%, γ グロブリン 37.5%であった。免疫血清学的検査では、CRP (+), ASLO (-), RA (+), LE (-), 梅毒血清反応 (-)。胸部X線所見では、右肺上葉に異常陰影があり、内部に空洞形成を認めた (Fig. 1)。皮膚生検では、潰瘍形成があり著明な細胞浸潤および小血栓形成を認めた (Fig. 2)。鼻腔生検では、ほとんど全体にわたって肉芽腫様病変がみられ、高度な細胞浸潤、小血管の増殖や組織破壊を認めた。

臨床症状および諸検査の結果、Wegener 肉芽腫症と診断された。1977年3月31日に施行した腎生検では、間質に小円形細胞の浸潤と尿管の膨化をみる以外、Wegener 肉芽腫症に特異的な所見は認めなかった (Fig. 3)。

Fig. 4 に示すごとく、ステロイドその他、免疫抑制剤にて加療中、入院後約6カ月を経過した1977年6月

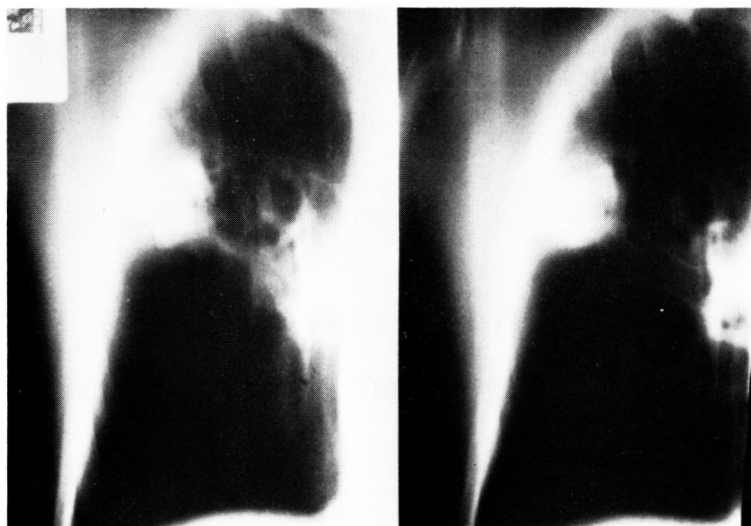


Fig. 1. 胸部断層撮影。13 cm (左図) にて右肺上葉に明らかな空洞形成を認める。



Fig. 2. 皮膚生検の組織像 (H. E. $\times 100$). 著明な細胞浸潤を認める。

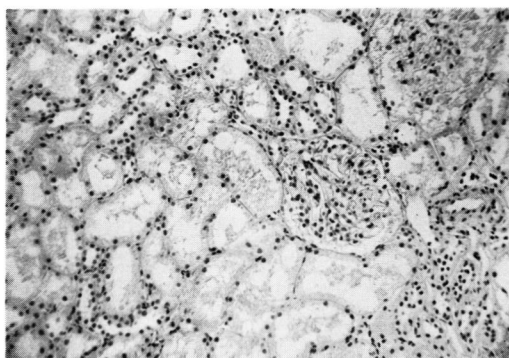


Fig. 3. 腎生検の組織像 (H. E. $\times 200$). 間質に小円形細胞の浸潤と尿管の膨化を認める。

3日、左陰囊内容の無痛性腫張に気づき、当科へ紹介された。

当科初診時所見：左睾丸は鶏卵大に腫張し、弾性硬、表面平滑で周囲組織との癒着もなく、圧痛、発赤、熱感、透光性もなかった。左副睾丸は鑑別触知不能であった。右睾丸、副睾丸ともに正常で、左右精索も正常であった。両鼠径部にリンパ節は触れなかった。

当科検査所見：血沈1時間値 15 mm。尿所見；蛋白陰性、糖陽性、沈渣では毎視野に白血球、赤血球ともに0~1個、顆粒円柱を認めた。血液所見；赤血球 $366 \times 10^4/\text{mm}^3$ 、白血球 $6100/\text{mm}^3$ 、血色素 12.5 g/dl、ヘマトクリット 36.4%、BUN 25.4 mg/dl、クレアチニン 0.6 mg/dl。胸部X線所見では、右肺上葉の異常陰影は増大傾向はなく、むしろ縮小傾向を認めた。

入院後約6カ月経過した時点で、Wegener 肉芽腫症については、検査所見の改善から治療が効果的であったと考えられた。

DIP では、特記すべき所見は認めなかった。

局所所見から左睾丸腫瘍を疑ったが、特異的な検査では、ヒト絨毛性ゴナドトロピン (HCG)、 α -fetoprotein はともに陰性であった。

1977年6月8日、左高位除睾丸術を施行した。

手術所見：左睾丸および精索は位置の異常なく、捻転も認めず、周囲との癒着もなく容易に剝離摘出できた。睾丸は、表面平滑で青白色を呈し、 $7 \times 4 \times 4$ cm 大 (Fig. 5)、断面では、内容は淡黄緑色の粘潤な液 30 ml をいれ、実質は 3 mm と薄く、あたかも卵の殻の観を呈していた (Fig. 6)。副睾丸、精索はともに正常

であった。内容液の培養では、一般細菌および結核菌ともに認められなかった。

組織所見：睾丸は広範囲におよぶ壊死と、びまん性細胞浸潤、残存精細管の基底膜肥厚および精子の低形成を認め、間質は浮腫状であった (Fig. 7)。一部に血栓形成があり、内膜の膨化も認められ、血栓を形成している血管の周囲には細胞浸潤および毛細血管の増生が認められた (Fig. 8)。副睾丸および精索は正常であった。

考 察

1. Wegener 肉芽腫症について

Wegener 肉芽腫症は Godman et al. によれば、①呼吸器系の壊死性肉芽腫性炎症、②全身の血管炎、③巣状あるいは肉芽腫性糸球体腎炎を三主徴とする特異な全身性疾患であり、組織学的には血管炎はおもに小動脈および細動脈にみられ⁴⁾、小血管に血栓を形成し微小梗塞を生じ大きな壊死巣に拡大してゆき、病巣は梗塞様または融解傾向を示す壊死をともなう場合が多い⁵⁾。一方、以上述べたような古典的な概念¹⁾とはことなり Carrington et al.⁶⁾は、糸球体腎炎を認めない軽症例を Wegener 肉芽腫症の limited form として報告している。Wegener 肉芽腫症の原因として、炎症説、腫瘍説、膠原病説、アレルギー説、過敏症説などが唱えられてきた⁷⁾が、いまだに本態は不明であり、現在のところ、血沈促進、高 γ -グロブリン血症、リウマチ因子の陽性、多彩な皮疹の出現、治療にはステロイドや種々の免疫抑制剤が奏効することより何ら

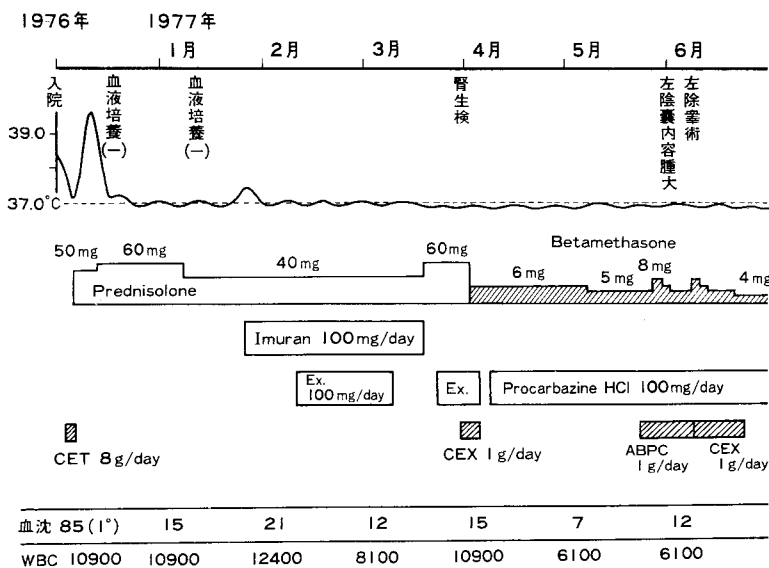


Fig. 4. 臨床経過.



Fig. 5. 摘除標本.
左高位除睾術を施行, 左睾丸は
7×4×4 cm 大.

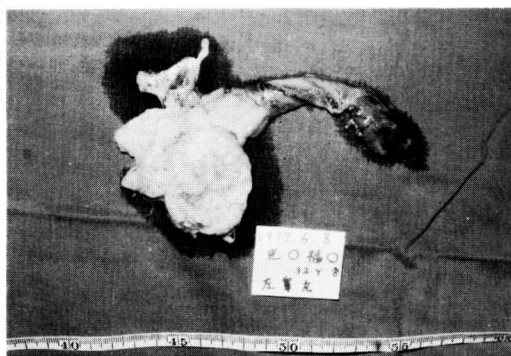


Fig. 6. 摘除標本の剖面.
内容な淡黄緑色の粘稠な液 30 ml をいれ,
実質は 3 mm と薄い.

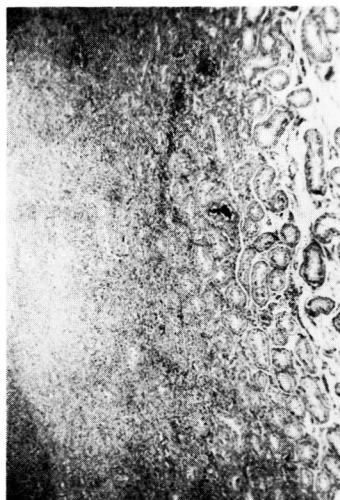


Fig. 7. 左睾丸の組織像 (H.E.×40).
広範囲におよぶ壊死と, びまん
性細胞浸潤を認める.



Fig. 8. 左睾丸の組織像 (Elastica van Gieson.
×200). 血栓形成を認める.

かの免疫, アレルギー機序が関与しているものと考えられている¹⁾.

本症例では, 皮膚の症状, 肺のX線所見, 種々の検査所見 および 鼻腔, 皮膚の生検所見から, Wegener 肉芽腫症と診断され, 睾丸における組織所見が皮膚生検でみられた組織所見と合致し, その壊死性変化は Wegener 肉芽腫症の一症候である血管炎による血行不全によるものであると考えられた.

2. Wegener 肉芽腫症における睾丸病変

Wegener 肉芽腫症の泌尿生殖器系の病変に関する報告をみると, 剖検例では Table 1 に示すごとく腎に最も多く, 野村ら⁸⁾によると23例中70%, Walton²⁾によると54例中78%にみられており, 睾丸にも野村らによると17%, Walton によると9%に血管炎を認めており, けっして少ないものではない. しかし, 臨床

上, 睾丸炎を思わせる症状を認めた報告例は少なく, われわれの調べ得た範囲では, Table 2 に示すごとく, 経過中睾丸炎を認め, 尿毒症で死亡したが, 剖検では睾丸の急性血管炎であった39歳例⁹⁾, 臨床末期に睾丸炎症状を呈し, 剖検では壊死性血管炎であった25歳例¹⁰⁾, まず左, そして右睾丸腫脹および疼痛をきたしたが自然軽減し, 生検は施行しなかった limited form の11歳例¹¹⁾, 睾丸痛を訴えたが, 生検はおこなわれなかった33歳例¹²⁾の4例であり, よく似た症状を呈した報告例では, 一過性の急性睾丸炎症状を初発症状とし, 左睾丸下極に2 cm 大の腫瘍を認めたが, 剖検では副睾丸の壊死性肉芽腫であった50歳例⁹⁾, 睾丸炎症状を呈したが, 剖検で副睾丸炎であった50歳例³⁾がある.

ほか泌尿生殖器系では, 本邦において2例の陰茎壊死が報告されており^{7, 13)}, これら症例もその原因と

Table 1. Wegener 肉芽腫症の病変部位別頻度.

血管炎	本邦23例*	欧米54例**
上気道	61%	26%
肺	52	87
脾	70	78
腎	70	78
肝	39	19
心	26	28
腸	39	24
皮膚	9	18
脂肪組織	9	15
随意筋	9	15
脾	22	9
副腎	26	11
睾丸	17	9
胆嚢	17	7
末梢神経		7
脳	17	

* 野村益世ら 1970
** Walton 1958

しては Wegener 肉芽腫症による血管炎が主因と推測されている。

今回、われわれが経験した症例ではステロイドおよび免疫抑制剤による治療中に、全く無症状に経過し、局所所見から悪性腫瘍を疑われ、除睾術を施行し、摘除標本では睾丸実質がほとんど融解壊死に陥っていた。無症状に経過した点と壊死形態が中心性広範壊死であった点が興味深く思われた。

睾丸に言及していえば、一般に陰嚢内臓器の疾患は視診上あるいは触診上比較的発見されやすいものであり¹⁴⁾、Wegener 肉芽腫症においては、Table 1 に示すように顕微鏡的に睾丸に血管炎を認める症例は少なくないにもかかわらず、臨床的にその病変が認識されず、看過されているのは、ほとんど無症状に経過した例が多いためと考えられる。

3. 睾丸壊死について

一般に、睾丸壊死の原因としては、局所の血行障害

Table 2. Wegener 肉芽腫症で睾丸炎症状を認めた報告例.

No.	報告者 (年度)	年齢	患側	主訴	転帰	局所所見	病理所見	その他
1	Fahey et al. ⁹⁾ (1954)	39歳	記載なし	睾丸痛	軽快	記載なし	記載なし	尿毒症で死亡
2	Berman et al. ¹⁰⁾ (1963)	25歳	記載なし	睾丸痛	記載なし	記載なし	壊死性血管炎 (剖検所見)	心不全で死亡
3	Cassan et al. ¹¹⁾ (1966)	11歳	両側	睾丸腫張 および疼痛	自然軽減	記載なし	記載なし	
4	Fauci et al. ¹²⁾ (1973)	33歳	記載なし	睾丸痛	記載なし	記載なし	生検施行せず	心不全で死亡
5	自験例	31歳	左側	睾丸無痛 性腫張	除睾術	7×4×4 腫瘍	壊死性血管炎	

をきたす血栓、栓塞、動脈炎、痙攣性閉塞などの直接血管閉塞と、精索捻転、睾丸脱、外傷、炎症後の瘢痕による圧迫などの間接的な血管閉塞とがある¹⁵⁾。しかし、睾丸は睾丸動脈を主とし、挙睾筋動脈、浅および深陰部動脈などからも血液を供給されているので、睾丸動脈のごとく大きな動脈に閉塞をきたしても、睾丸は萎縮する程度で壊死に至ることは少ない¹⁶⁾。松永¹⁴⁾の報告した精索血管系にみられた閉塞性血栓血管炎の例でも睾丸に軽度の萎縮を認めたのみである。

われわれの症例では、睾丸動静脈のごとき大きな血管系になら異常を認めず、睾丸の中心壊死をきたしていることから、睾丸実質内の細小動静脈において閉塞したものと考えられる。このことは、全身性の細小動静脈炎を特徴とする Wegener 肉芽腫症を基礎疾患とする本症例ではじゅうぶん考えられることであり、実際に睾丸にみられた組織所見が皮膚の生検所見と同

一の変化であったことからみても、この睾丸病変は Wegener 肉芽腫症の一症候であると考えられた。

よく似た睾丸所見を呈するものに特発性睾丸梗塞症があげられる。重松ら¹⁷⁾が、本邦における特発性睾丸梗塞症64例を集計しており、いずれも誘因となる基礎疾患は認めていない。63例に除睾術を施行しており、術前に睾丸腫瘍と診断されたものが12例あり、血栓形成を12例に認め、動脈炎を2例に認めている。このことから、血管病変による睾丸壊死は、そう少ないものではないと考えられるが、ただ、本症例のように Wegener 肉芽腫症の一症候として睾丸壊死を認めた症例はきわめてまれであると考えられる。

4. 膿瘍について

本症例では、肉眼的に睾丸実質の融解壊死巣が認められたが、その一原因として感染由来による膿瘍形成も考えられる。事実、長時間にわたる免疫抑制剤の使

用により、ノカルジア症が睪丸膿瘍として現われることが報告されている¹⁸⁾。この報告例では、右睪丸に有痛性の腫脹および発熱をきたし、除睪術を施行し、内容液の培養で *Nocardia asteroides* が検出されている。

しかし、本症例では発熱および疼痛などの炎症所見がなく、摘除標本内容液の培養で起炎菌が認められなかったことから、ノカルジア症や結核性あるいは一般細菌性感染症は除外されるものと考えられる。

今回、われわれは睪丸膿瘍なる用語をもって本症を表現しているが、本来膿瘍とは化膿性炎症が限局性に起こり、局所の組織が融解して膿が限局したものをいい¹⁹⁾、本症例とは多少趣を異にしているものの、文献的には岸川ら¹⁰⁾は肺病変において、今回のような中心部に融解壊死をとまなう場合に、空洞化あるいは膿瘍化という言葉を使っており、その用法を踏襲すれば、本症例における睪丸病変を睪丸膿瘍と呼ぶのも無理ではないと思われる。

こんにち、ステロイドその他、免疫抑制剤等による治療の進歩にともない、臨床経過を延長できるようになってきたので、泌尿器科領域においても今後ますます遭遇する機会の多くなる疾患であると思われる。

結 語

31歳、男子、Wegener 肉芽腫症にて皮膚科入院加療中、左陰嚢内容の無痛性腫脹をきたした症例を経験し、除睪術を施行した。組織学的に、睪丸実質の広範囲にわたる融解壊死および血管炎を認め、Wegener 肉芽腫症の一症候であると考えられた。

稿を終えるにあたり、御校閲をたまわった、恩師園田孝夫教授に感謝いたします。

なお、本論文の要旨は第80回日本泌尿器科学会関西地方会で発表した。

参 考 文 献

- 1) 森本靖彦：新内科学大系，初版，57 (B)：228，中山書店，東京，1975。
- 2) Walton, E. W.: Brit. Med. J., 2: 265, 1958.
- 3) Godman, G. C. and Churg, J.: Arch. Path., 58: 533, 1954.
- 4) 三上理一郎：最新医学，31: 1508, 1976.
- 5) 岸川英樹・ほか：福岡医誌，66: 199, 1975.
- 6) Carrington, C. B. et al.: Amer. J. Med., 41: 497, 1966.
- 7) 長田尚夫・ほか：臨泌，28: 549, 1974.
- 8) 野村益世・池田隆夫：内科，25: 872, 1970.
- 9) Fahey, J. L. et al.: Amer. J. Med., 17: 168, 1954.
- 10) Berman, D. A. et al.: Ann. Intern. Med., 59: 521, 1963.
- 11) Cassan, S. M. et al.: Amer. J. Med., 49: 366, 1970.
- 12) Fauci, A. S. et al.: Medicine, 52: 535, 1973.
- 13) Matsuda, S. et al.: Tohoku J. Exp. Med., 118: 145, 1976.
- 14) 松永武三：泌尿紀要，6: 400, 1970.
- 15) 石神襄次：日本泌尿器科全書，初版，6: 78，金原出版，東京・京都，1960.
- 16) Maluf, N. S. R.: J. Urol., 78: 437, 1937.
- 17) 重松俊明・ほか：泌尿紀要，18: 851, 1972.
- 18) Strong, D. W. and Hodges, C. V.: Urology, 7: 57, 1976.
- 19) 小川鼎三・ほか：医学大辞典，初版，867，南山堂，東京，1954.

(1978年1月12日受付)